



## Tumor de la infancia infrecuente y localmente agresivo: reporte de caso de fibroma ameloblástico

Francisco Javier Félix Rojas,\* Luis Alonso Salazar Navarro,\*§ Julio Benítez Pascual,\* Efrén Rafael Ríos Burgueño,¶ Ricardo Ochoa Viedas,¶ Cynthia Marina Urias Barreras\*¶

\* Facultad de Odontología, Universidad Autónoma de Sinaloa. México.

§ Servicio de Cirugía Oral y Maxilofacial, Hospital General Regional No. 1, IMSS. México.

¶ Servicio de Anatomía Patológica, Centro de Investigación y Docencia en Ciencias de la Salud, Universidad Autónoma de Sinaloa. México.

### RESUMEN

**Introducción:** El fibroma ameloblástico es un tumor odontogénico mixto, benigno e infrecuente; constituye 1.5-6.5% de los tumores odontogénicos. Se considera un tumor de la infancia, con ligera predilección por el género masculino y fuerte por la región posterior de la mandíbula. Su tratamiento más común, enucleación y curetaje es controversial, debido a la posibilidad de recurrencia y transformación maligna. **Presentación del caso:** Se reporta un caso de paciente femenino de 12 años, con aumento de volumen asintomático en mandíbula del lado izquierdo. Radiográficamente, se observó una zona radiolúcida multilocular, en cuerpo mandibular y rama ascendente, asociada a un segundo molar inferior impactado y desplazado. Se realizó una enucleación y curetaje con colocación de aloinjerto. En el examen microscópico, se observó una proliferación neoplásica de células mesenquimales sobre un estroma mixoide similar a la papila dental, y de células epiteliales dispuestas en folículos y cordones, sin formación de tejidos dentales duros. Por persistencia de la lesión, se realizó una reintervención quirúrgica con resección mandibular y colocación de placas de titanio. Después de 30 meses de seguimiento, la paciente se encuentra libre de lesión y en proceso de rehabilitación oral. **Conclusión:** El fibroma ameloblástico puede mostrar un comportamiento agresivo persistente a un tratamiento conservador y requerir una intervención quirúrgica radical, por lo que el seguimiento a largo plazo es indispensable.

**Palabras clave:** Tumor odontogénico, fibroma ameloblástico, mandíbula, fibroodontoma.

### INTRODUCCIÓN

La Organización Mundial de la Salud (OMS) define al fibroma ameloblástico (FA) como un tumor mixto raro, benigno y verdadero, compuesto por mesénquima odontogénica que se asemeja a la papila dental y tejido epitelial, que a su vez se asemeja a la lámina dental y al órgano del esmalte, en el que no hay tejidos dentales duros. Constituye 1.5-6.5% de todos los tumores odontogénicos, y se presenta principalmente entre la primera y la segunda décadas de la vida, la edad promedio es a los 14.9 años.<sup>1-4</sup>

Tiene ligera predilección por el género masculino, la proporción M:F es 1.4:1. La región posterior de la mandíbula es su localización más común, con una proporción mandíbula:maxilar de 3.3:1. Clínicamente, aparece con aumento de volumen asintomático, de crecimiento lento y puede causar expansión ósea con deformidad facial.<sup>1-6</sup> Radiográficamente, el FA se presenta como una lesión radiolúcida bien definida, unilocular o multilocular, asociada con un diente impactado en la mayoría de los casos y a menudo se observa reabsorción radicular y perforación de las corticales óseas.<sup>1,3</sup>

Macroscópicamente, el tumor es sólido, con una superficie externa lisa y puede estar encapsulado.<sup>1</sup> Microscópicamente, la neoplasia muestra dos componentes, el componente mesenquimal, mixoide y que recuerda a la papila dental; y el componente epitelial, que puede observarse en cordones de células cúbicas a columnares, con engrosamientos que incluyen áreas tipo retículo estrellado entre las células epiteliales periféricas similar a folículos dentales. Además, en algunos casos se observa una cápsula fibrosa.<sup>1,3,7-9</sup>

El tratamiento del FA generalmente implica un enfoque quirúrgico conservador en lesiones pequeñas;

Recibido: Mayo 2021. Aceptado: Agosto 2021.

**Citar como:** Félix RFJ, Salazar NLA, Benítez PJ, Ríos BER, Ochoa VR, Urias BCM. Tumor de la infancia infrecuente y localmente agresivo: reporte de caso de fibroma ameloblástico. Rev Odont Mex. 2021; 25 (3): 264-271.

© 2021 Universidad Nacional Autónoma de México, [Facultad de Odontología]. Este es un artículo Open Access bajo la licencia CC BY-NC-ND (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc-nd/4.0/>)

sin embargo, se reporta recurrencia en 16% de los casos tratados de manera ultraconservadora. En caso de lesiones extremadamente destructivas y recurrentes, se recomienda la cirugía radical. La transformación maligna a un fibrosarcoma ameloblástico (FSA) es infrecuente, pero en 50% de los casos surge de un FA recurrente.<sup>1,2,4,5,8</sup>

Se presenta un caso de FA en mandíbula posterior, persistente a un manejo quirúrgico conservador, requiriendo un tratamiento quirúrgico radical.

### REPORTE DE CASO

Paciente femenina de 12 años de edad, fue remitida al Departamento de Cirugía Oral y Maxilofacial del IMSS (HGR 1), presentando asimetría facial por aumento de volumen en el tercio inferior izquierdo, con tiempo de evolución desconocido (*Figura 1A*). En el interrogatorio, la paciente negó parestesia, dolor y movilidad de los órganos dentales (OD); además, sus antecedentes médicos personales y heredofamiliares no contribuyeron al padecimiento actual. Intraoralmente, se observó expansión de las corticales óseas y ausencia del OD 37; sin embargo, la mucosa estaba intacta y no dolorosa a la palpación.

Radiográficamente, la ortopantomografía (OPG) evidenció una gran lesión radiolúcida multilocular, expansiva, con bordes escleróticos y diminutas zonas radiopacas, con reabsorción radicular del OD 35 y 36, así como desplazamiento del OD 37 hacia el borde basal mandibular (*Figura 1B*). Por las características clínicas, radiográficas y el involucramiento de un OD, el diagnóstico diferencial incluyó una lesión de origen odontogénico benigna como quiste dentígero, queraquiste odontogénico y FA. Bajo anestesia general y con intubación orotraqueal, se procedió a la enucleación y curetaje de la lesión, que mostró características fibrosas y se desprendía en porciones (*Figura 1C*), el OD 37 también se extrajo. Después se colocó injerto alógeno, la paciente se revirtió sin complicaciones y fue dada de alta siete días después.

Macroscópicamente, el espécimen multifragmentado de tejido blando en conjunto midió 3.0 x 3.0 x 2.0 cm, de forma y superficie irregular, color café claro y de consistencia firme, con pieza dental correspondiente a OD 37 (*Figura 2A*). Microscópicamente, se observó una neoplasia odontogénica mixta benigna, caracterizada por la proliferación bien delimitada de células cúbicas a columnares de tipo ameloblástico, con núcleos fusiformes y polarización distal a la membrana basal y de moderado a escaso citoplasma, dispuestas en cordones, nidos y folículos, cuyo interior mostró células fusiformes de tipo retículo estrellado,

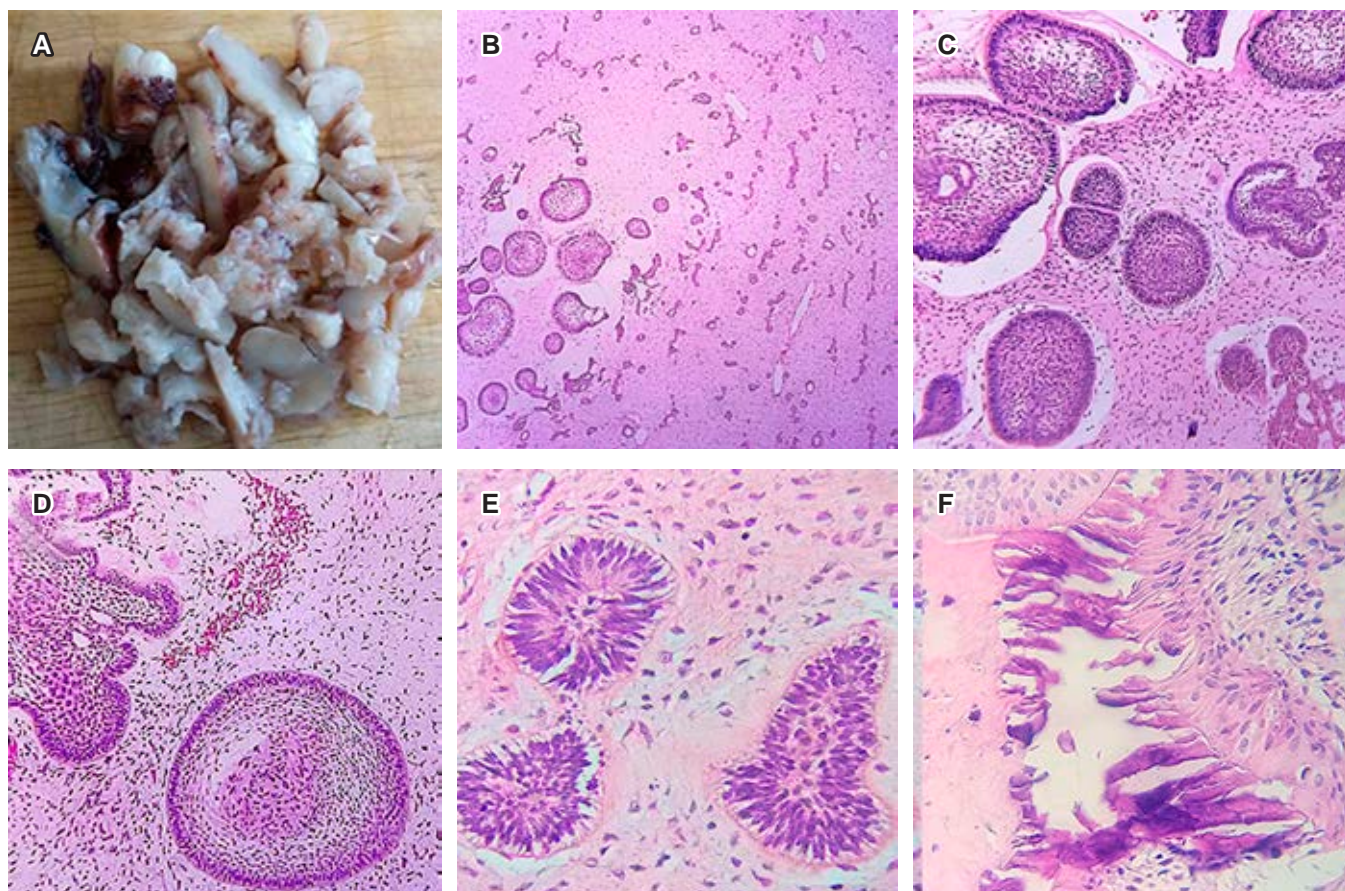
sobre un estroma mixoide, con proliferación de células mesenquimales, con áreas de hiper celularidad, así como un foco de calcificaciones distróficas (*Figura 2B-2F*). Se emitió el diagnóstico de FA.

Dos meses después de la cirugía, se solicitó una OPG para el control radiográfico, sin evidencia de alteraciones (*Figura 3A*). A los seis meses de seguimiento, una OPG evidenció una zona radiolúcida mal definida, con bordes irregulares, en el área del injerto óseo (*Figura 3B*), se interpretó como persistencia de la lesión y se remitió a la paciente al Centro Médico de Pediatría del IMSS, UMAE, en la ciudad de Guadalajara, Jalisco, para un tratamiento quirúrgico radical, que consistió en una resección mandibular con colo-



**Figura 1:** **A)** Aumento de volumen en el tercio facial inferior izquierdo. **B)** Lesión mandibular expansiva y destructiva con OD 37 impactado y desplazado. **C)** Enucleación quirúrgica.

**A)** Swelling in facial left lower third. **B)** Expansive and destructive mandibular lesion with impacted and displaced DO 37. **C)** Surgical enucleation.



**Figura 2:** **A)** Características macroscópicas del espécimen. **B, C)** Cordones, nidos y folículos de epitelio ameloblástico dispuestos sobre una proliferación de células mesenquimales (H&E, 40x/100x). **D, E)** Nidos con células epiteliales cilíndricas en empalizada y con polarización inversa, dispuestos entre células mesenquimales ovales o fusiformes (H&E, 100x/400x). **F)** Área de calcificación distrófica (H&E, 400x).

**A)** Specimen's macroscopic features. **B, C)** Ameoblastic epithelium's cords, nests and follicles arranged on a mesenchymal cell proliferation (H&E, 40x/100x). **D, E)** Nests with palisade cylindrical epithelial cells with reverse polarization, arranged between oval or spindle-shaped mesenchymal cells (H&E, 100x/400x). **F)** Dystrophic calcification area (H&E, 400x).

cación de placas de titanio e injerto microvascularizado de peroné (*Figura 3C*).

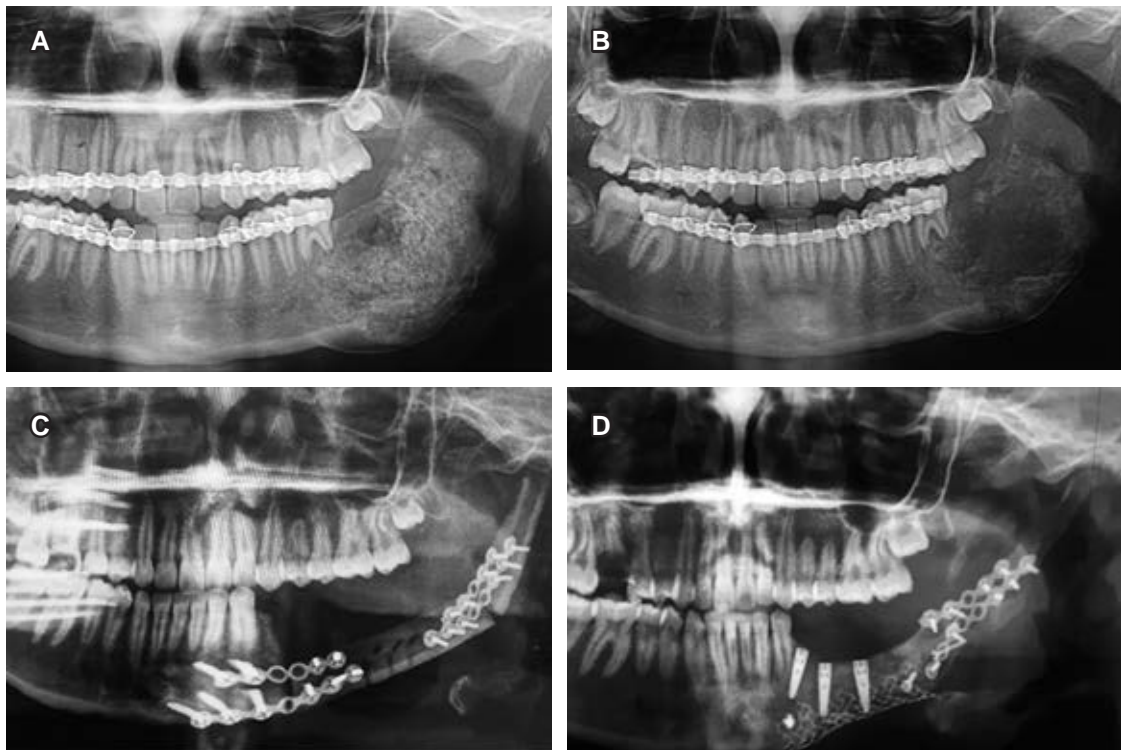
Ocho meses después, extraoralmente se observó ligera asimetría facial (*Figura 4A*). Al realizar el examen intraoral, se observó la mucosa en condiciones normales (*Figura 4B*). Después de 30 meses de seguimiento, la paciente se encuentra libre de lesión y en proceso de rehabilitación oral mediante la colocación de implantes, con el objetivo de devolver la función masticatoria y estética (*Figura 3D*).

## DISCUSIÓN

El FA es un tumor odontogénico mixto benigno, relativamente infrecuente, que se presenta principalmente entre la primera y la segunda décadas de vida,

con una media de edad a los 14 años y la mayoría de los casos ocurren antes de los 22 años;<sup>1</sup> sin embargo, en la literatura existen casos reportados en pacientes de siete semanas de edad,<sup>3</sup> y en pacientes de 38 años.<sup>4</sup> Este tumor tiene ligera predilección por el género masculino.<sup>1</sup> En un análisis de 172 casos de FA, las diferencias en la distribución de género no fueron estadísticamente significativas.<sup>5</sup> Su localización más común es la mandíbula en la región posterior y la mayoría de las lesiones del maxilar se presentan en la región anterior.<sup>5</sup> No obstante, Côrte et al.<sup>6</sup> reportaron un caso de FA en el segmento mastoideo del hueso temporal.

Clinicamente, esta lesión generalmente presenta aumento de volumen y expansión ósea con deformidad facial. Radiográficamente, el FA presenta radio-



**Figura 3:** **A)** Injerto óseo y ausencia de lesión. **B)** Área radiolúcida irregular en la zona del injerto óseo. **C)** Placa de titanio colocada en la segunda intervención quirúrgica. **D)** Implantes dentales y ausencia de lesión.

**A)** Bone graft and lesion absence. **B)** Irregular radiolucent area in the bone graft region. **C)** Titanium plate placed the second surgical intervention. **D)** Dental implants and lesion absence.



**Figura 4:**

Apariencia extraoral e intraoral posterior a la segunda intervención quirúrgica.

*Extra oral and intra oral appearance after the second surgical intervention.*

lucencias uniloculares o multiloculares bien definidas, con asociación a un diente impactado o retenido hasta en 80% de los casos;<sup>1</sup> debido a esto, autores mencionan que a menudo esta lesión suele confundirse con ameloblastoma y quiste dentígero.<sup>7</sup> Las lesiones uniloculares generalmente son pequeñas y asintomáticas, mientras que las multiloculares se asocian a lesiones más grandes y destructivas,<sup>1,7</sup> siendo estas características clínicas y radiográficas consistentes con nuestros hallazgos.

Dentro de las características histopatológicas del FA, cuando el cambio inductivo ha resultado en el depósito de dentina o dentina más esmalte, se denominaba fibrodentinoma ameloblástico (FDA) y fibroodontoma ameloblástico (FOA), respectivamente.<sup>1,7</sup> La actual clasificación de la OMS enfatiza que dicha formación de tejido duro suele ser la primera etapa de la maduración y es más compatible con un odontoma en desarrollo.<sup>1,8,9</sup> Esta postura sigue siendo controversial, ya que se reconoce que algunas de estas lesiones (FDA, FOA) pueden alcanzar grandes tamaños y surgir en grupos de edad que no siempre son consistentes con una lesión hamartomatosa como los odontomas,<sup>9</sup> tal como Chrcanovic et al.<sup>10</sup> observaron en su análisis, en donde algunos casos de FDA y FOA afectaron a pacientes mayores de 20 años, lo que supera la edad de una formación dental esperada. Además, la edad media de los pacientes con estas lesiones fue muy similar, lo que no respalda el concepto de maduración progresiva de estas afecciones tumorales, sugiriendo que algunos FDA y FOA son lesiones verdaderamente neoplásicas.

Últimamente se han reportado características moleculares de estos tumores odontogénicos mixtos, mencionando que FA, FDA y FOA muestran mutaciones en el gen BRAF en su componente mesenquimal, a diferencia del odontoma que no evidencia dicha alteración, sugiriendo que al menos un grupo de FA, FDA y FOA son molecularmente distintos del odontoma, y pueden representar entidades distintas y ser neoplásicas.<sup>11</sup>

El manejo del FA puede ser un desafío y actualmente no existe un consenso claro con respecto a un enfoque quirúrgico óptimo. El tratamiento puede variar desde un método conservador como enucleación y curetaje, o tratamientos radicales como la resección marginal o segmentaria. Los tumores pequeños y asintomáticos (especialmente en niños pequeños), se extirpan de forma conservadora y para los tumores extensos y destructivos se recomienda cirugía radical.<sup>1,2</sup>

De Campos et al.<sup>8</sup> reportan el caso de un paciente pediátrico con diagnóstico de FA localmente agresivo

tratado con cirugía conservadora, con un seguimiento a 12 años y sin recurrencia de la lesión, por lo que sugieren que el tratamiento conservador en pacientes jóvenes es eficaz y tiene la ventaja de reducir la morbilidad quirúrgica. Respecto a esto, Mosby<sup>3</sup> y Buchner<sup>5</sup> proponen que el tratamiento conservador en ocasiones puede resultar en una recurrencia, que en realidad es la proliferación del tumor residual. Por otra parte, Sanadi et al.<sup>2</sup> presentan el caso de una paciente adulta tratada inicialmente con cirugía radical, tomando en cuenta la posibilidad de recurrencia y transformación maligna que tiene esta lesión. Buchner et al.<sup>5</sup> exponen que las tasas de recurrencia podrían estar sesgadas, ya que generalmente los estudios que informan las tasas relativamente altas de recurrencia y transformación maligna, se basan principalmente en reportes de casos compilados de la literatura, y por tal razón no pueden estimarse con precisión. No obstante, se ha cuestionado si los protocolos de tratamiento del FA deberían ser revisados, ya que 44% de los FSA surgen de FA recurrentes.<sup>12,13</sup> Recientemente, se han identificado características moleculares del FSA, resaltando mutaciones frecuentes en BRAF y ocasionales en NRAS, y se propone que los FSA deberían ser analizados para estas mutaciones, dada la disponibilidad de fármacos prometedores aprobados dirigidos al gen BRAF mutante.<sup>14</sup>

En nuestro caso se utilizó un enfoque conservador como primera intervención quirúrgica, teniendo en cuenta la edad de la paciente, y posteriormente un enfoque quirúrgico radical por persistencia de la lesión. Cada caso debe tener un tratamiento quirúrgico individualizado, con una inspección cuidadosa, tomando en cuenta la edad del paciente, el tamaño de la lesión, los hallazgos histopatológicos, la posible recurrencia y su transformación maligna.

## CONCLUSIÓN

El FA puede mostrar un comportamiento agresivo persistente a un tratamiento conservador y requerir una intervención quirúrgica radical, por lo que el seguimiento a largo plazo es indispensable.

## Clinical case

### Uncommon and locally aggressive tumor of childhood. An ameloblastic fibroma case report

Francisco Javier Félix Rojas,\*  
Luis Alonso Salazar Navarro,\*§

Julio Benítez Pascual,\* Efrén Rafael Ríos Burgueño,†  
Ricardo Ochoa Viedas,†  
Cynthia Marina Urias Barreras\*,†

\* Facultad de Odontología, Universidad Autónoma de Sinaloa, México.

§ Servicio de Cirugía Oral y Maxilofacial, Hospital General Regional No. 1, IMSS, México.

† Servicio de Anatomía Patológica, Centro de Investigación y Docencia en Ciencias de la Salud, Universidad Autónoma de Sinaloa, México.

## ABSTRACT

**Introduction:** Ameloblastic fibroma is a rare, benign, mixed odontogenic tumor which represents 1.5-6.5% of odontogenic tumors. It is considered a tumor of childhood, with a slight predilection for the male gender. Its most common site of occurrence is the posterior region of the mandible. Its most common treatments, enucleation, and curettage are controversial due to the possibility of recurrence and malignant transformation. **Case report:** A case of a 12-year-old female patient is reported, with asymptomatic swelling in the left mandible. Radiographically, a multilocular radiolucent area was observed, in the mandibular body and ascending ramus, associated with an impacted and displaced lower second molar. Enucleation and curettage were performed with allograft placement. Microscopic examination revealed a neoplastic proliferation of mesenchymal cells on a myxoid stroma similar to the dental papilla, and of epithelial cells arranged in follicles and cords, with no hard dental tissues. Due to lesion persistence, another surgical intervention was performed with mandibular resection and titanium plates placement. After a thirty months follow-up, the patient does not have lesions and undergoing oral rehabilitation. **Conclusion:** Ameloblastic fibroma may show an aggressive persistent behavior to a conservative treatment and a radical surgical intervention could be necessary, so long-term follow-up is essential.

**Keywords:** Odontogenic tumor, ameloblastic fibroma, mandible, fibroodontoma.

## INTRODUCTION

The World Health Organization (WHO) defines ameloblastic fibroma (AF) as a rare, benign, true mixed tumor composed of odontogenic mesenchyme resembling dental papilla and epithelial tissue similar to the odontogenic epithelium, without dental hard tissues. It represents 1.5-6.5% of odontogenic tumors and mainly occurs between the first and second decades of life (the mean age is 14.9 years).<sup>1-4</sup>

AF has a slight predilection for the male gender, with male-female ratio of 1.4:1. It is seen most frequently in the mandibular posterior region with a mandible to maxilla ratio of 3.3:1. Clinically, it appears with slow-growing, asymptomatic swelling and may cause jaw expansion with facial deformity.<sup>1-6</sup> Radiographically, AF presents as a well-defined, unilocular or multilocular, radiolucent lesion associated with an impacted tooth in most cases, and root resorption and cortical bone perforation may be observed.<sup>1,3</sup>

Macroscopically, it is a solid tumor with a smooth external surface and may be encapsulated.<sup>1</sup> Microscopically, the neoplasm shows two components: the mesenchymal component, myxoid and reminiscent of the dental papilla; and the epithelial component, which can be observed in cords of cuboidal to columnar cells, with thickenings that include stellate reticulum-like areas between peripheral epithelial cells similar to dental follicles. In addition, in some cases a fibrous capsule is observed.<sup>1,3,7-9</sup>

AF treatment generally involves a conservative surgical approach in small lesions. However, a rate of recurrence is reported in 16% of cases ultra-conservatively treated. When extremely destructive and recurrent lesions, radical surgery is recommended. Malignant transformation to ameloblastic fibrosarcoma (AFS) is rare, but arises from a recurrent AF in 50% of cases.<sup>1,2,4,5,8</sup>

An AF case in the posterior mandible is presented, persistent after conservative surgical management, requiring radical surgical treatment.

## CASE REPORT

A 12-year-old female patient, referred to an oral and maxillofacial surgery area (*Departamento de Cirugía Oral y Maxilofacial del IMSS HGR 1*) presenting a facial asymmetry due to swelling in the left lower third, with unknown evolution time (*Figure 1A*). The patient denied paresthesia, pain and tooth mobility. Her personal and familiar medical history did not contribute to this condition. Intraorally, cortical bone expansion and absence of dental organ (DO) 37 were observed. However, the mucosa was intact and not painful to palpation.

Radiographically, the orthopantomograph (OPG) showed a large, expansive, multilocular radiolucent lesion with sclerotic borders and tiny radiopaque areas, with root resorption of DO 35 and 36, as well as tooth 37 mobility towards the mandibular basal border (*Figure 1B*). Due to the clinical and radiographic features and the involvement of a DO, the differential diagnosis included a lesion of benign odontogenic origin such as dentigerous cyst, odontogenic keratocyst and AF. Under general anesthesia and orotracheal intubation, enucleation and curettage of the lesion was performed, which showed fibrous characteristics and was detached in portions (*Figure 1C*). DO 37 was also extracted. Subsequently, an allogeneic graft was placed; the patient reverted without complications and was discharged seven days later.

Macroscopically, the fragmented soft tissue specimen measured 3.0 × 3.0 × 2.0 cm, irregular

in shape and surface, light brown color and firm consistency, corresponding to DO 37 (*Figure 2A*). Microscopically, a benign mixed odontogenic neoplasm was observed. It was featured by the well-defined proliferation of cuboidal to columnar ameloblastic cells, with spindle-shaped nuclei and distal polarization to the basement membrane and moderate to scarce cytoplasm. They were arranged in cords, nests and follicles; their interior showed stellate-reticulum like spindle cells, on a myxoid stroma, with proliferation of mesenchymal cells, exhibiting areas with hypercellularity, as well as a focus of dystrophic calcifications (*Figure 2B-2F*). The diagnosis of AF was issued.

Two months after surgery, an OPG for radiographic control showed that there was no evidence of alterations (*Figure 3A*). At six months follow-up, an OPG revealed a poorly defined radiolucent area, with irregular borders, in the bone graft area (*Figure 3B*). It was interpreted as persistence of the lesion and the patient was referred to a pediatric hospital (*Centro Médico de Pediatría del IMSS, UMAE*) in Guadalajara, Jalisco, Mexico, for a radical surgical treatment, which consisted of a mandibular resection with titanium plates placement and a microvascularized fibular graft (*Figure 3C*).

Eight months later, slight facial asymmetry is observed extra orally (*Figure 4A*). On intraoral examination, the mucosa was observed in standard conditions (*Figure 4B*). After a thirty-month follow-up, the patient is free of lesions and is in an oral rehabilitation process through implants placement, with the aim of recovering masticatory function and aesthetics (*Figure 3D*).

## DISCUSSION

AF is a relatively uncommon benign mixed odontogenic tumor that occurs primarily in the first to second decades of life, with a mean age of 14 years and most cases occur before 22.<sup>1</sup> However, cases of 7-week-old patients<sup>3</sup> and also 38-year-old patients have been reported in literature.<sup>4</sup> This tumor has a slight predilection for the male gender.<sup>1</sup> In an analysis of 172 AF cases, differences in gender distribution were not statistically significant.<sup>5</sup> Its most common location is the mandible in the posterior region and most of the maxillary lesions occur in the anterior region.<sup>5</sup> However, Côrte et al.<sup>6</sup> reported an AF case in the mastoid segment of the temporal bone.

Clinically, this lesion in general presents swelling and cortical expansion with facial deformity. Radiographically, AF shows unilocular

or multilocular well-defined radiolucencies, associated with an impacted tooth up to 80% of cases.<sup>1</sup> Due to this, some authors mention that this lesion is often confused with ameloblastoma and dentigerous cyst.<sup>7</sup> Usually unilocular lesions are small and asymptomatic, while multilocular ones are associated with larger and more destructive lesions.<sup>1,7</sup> These clinical and radiographic features being consistent with our findings.

When an inductive modification produced a deposition of dentin or dentin plus enamel, this histopathological feature was called ameloblastic fibrodentinoma (AFD) and ameloblastic fibroodontoma (AFO) respectively.<sup>1,7</sup> The current WHO classification emphasizes that such hard tissue formation is usually the first stage of maturation and is more consistent with a developing odontoma.<sup>1,8,9</sup> This position remains controversial as it is recognized that some of these lesions (AFD, AFO) may reach large sizes and arise in age groups which are not always consistent with a hamartomatous lesion such as odontomas,<sup>9</sup> as observed by Chrcanovic et al.<sup>10</sup> they found some cases of AFD and AFO affected patients older than 20 years, which exceeds the expected age for dental formation. Furthermore, the mean age of patients with these lesions was very similar, which does not support the concept of progressive maturation of these tumoral conditions, and suggests that some AFDs and AFOs are truly neoplastic lesions.

Recently, some molecular features of these mixed odontogenic tumors have been reported, pointing out that AF, AFD and AFO show BRAF gene mutations in the mesenchymal component, unlike odontoma which does not show such alteration, suggesting that at least a subset of AF, AFD, and AFO are molecularly distinct from odontoma, and may represent distinct entities and be neoplastic.<sup>11</sup>

AF management could be a challenge. Currently there is no consensus regarding to the best surgical approach. Treatment may vary from a conservative method as enucleation and curettage, to radical treatments such as marginal or segmental resection. Small and asymptomatic tumors (especially in little children) are conservatively removed and for extensive and destructive tumors a radical surgery is recommended.<sup>1,2</sup>

De Campos et al.<sup>8</sup> report the case of a pediatric patient diagnosed with locally aggressive AF who underwent conservative surgery, with a 12 years follow-up and no signs of recurrence of the lesion, which suggests that a conservative treatment in young patients is effective and offers a reducing

surgical morbidity. Regarding this, Mosby et al.<sup>3</sup> and Buchner et al.<sup>5</sup> suggest that conservative treatment may sometimes cause recurrence, which actually is the proliferation of a residual tumor. On the other hand, Sanadi et al.<sup>2</sup> report the case of an adult patient who underwent radical surgery at the beginning, considering the possibility of recurrence and malignant transformation of this lesion. Buchner et al.<sup>5</sup> state that the recurrence rates could be biased as the studies reporting relatively high rates of recurrence and malignant transformations are mainly based on case reports available in the literature, thus cannot be calculated accurately. However, it has been questioned whether AF treatment protocols should be reviewed, since 44% of AFS arise from recurrent AF.<sup>12,13</sup> Recently, AFS molecular features have been identified, highlighting frequent BRAF and occasional NRAS mutations and it has been suggested that AFS should be tested for these mutations, given the availability of approved promising drugs targeting the mutant BRAF gene.<sup>14</sup>

In our case a conservative approach was used as the first surgical intervention, considering patient's age and later a radical surgical approach due to the lesion persistence. There must be an individualized surgical treatment in each and every case, with a careful inspection, considering the patient's age, lesion size, histopathological findings, possibility of recurrence and malignant transformation.

## CONCLUSION

AF may show an aggressive persistent behavior to a conservative treatment and a radical surgical intervention could be necessary, so long-term follow-up is essential.

## REFERENCIAS / REFERENCES

1. Takata T, Slootweg PJ. *Odontogenic and maxillofacial bone tumours*. In: El-Naggar A, Chan J, Grandis J, eds. WHO classification of head and neck tumours. 4th ed. Lyon: International Agency for Research on Cancer; 2017. pp. 222-223.
2. Sanadi A, Shah SJ, Golgire S, Shetti S. Highly proliferative ameloblastic fibroma: a rare entity. *Contemp Clin Dent*. 2018; 9 (4): 656-658.
3. Mosby EL, Russell D, Noren S, Barker BF. Ameloblastic fibroma in a 7-week-old infant: a case report and review of the literature. *J Oral Maxillofac Surg*. 1998; 56 (3): 368-372.
4. Tozoglu S, Hatipoglu M, Aytekin Z, Gurer EI. Extensive ameloblastic fibroma of the mandibula in a female adult patient: A case report with a follow-up of 3 years. *Eur J Dent*. 2016; 10 (1): 139-143.
5. Buchner A, Vered M. Ameloblastic fibroma: a stage in the development of a hamartomatous odontoma or a true neoplasm? Critical analysis of 162 previously reported cases plus 10 new cases. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol*. 2013; 116 (5): 598-606.
6. Côte AF, Moura CP, Filipe JP, Vaz R, Sucesso MDB, Pereira J et al. Ameloblastic fibroma with an unusual location. *Otol Neurotol*. 2018; 39 (10): 1176-1178.
7. Khande KC, Mograwala HJ, Halli RC, Hebbale MA. Ameloblastic fibroma mimicking dentigerous cyst: a diagnostic dilemma. *Ann Maxillofac Surg*. 2019; 9 (1): 201-204.
8. De Campos WG, Esteves CV, Paiva GA, Zambon CE, Rocha AC, Lemos CA. Successful management of a gigantic ameloblastic fibroma: a 12-year follow-up. *Ann Maxillofac Surg*. 2019; 9 (1): 197-200.
9. Speight PM, Takata T. New tumour entities in the 4th edition of the World Health Organization Classification of Head and Neck tumours: odontogenic and maxillofacial bone tumours. *Virchows Arch*. 2018; 472 (3): 331-339.
10. Chrcanovic BR, Gomez RS. Ameloblastic fibrodentinoma and ameloblastic fibro-odontoma: an updated systematic review of cases reported in the literature. *J Oral Maxillofac Surg*. 2017; 75 (7): 1425-1437.
11. Coura BP, Bernardes VF, de Sousa SF, Diniz MG, Moreira RG, de Andrade BAB et al. Targeted next-generation sequencing and allele-specific quantitative PCR of laser capture microdissected samples uncover molecular differences in mixed odontogenic tumors. *J Mol Diagn*. 2020; 22 (12): 1393-1399.
12. Munisekhar MS, Shylaja S, Kumar RV, Rao KA, Patil SR, Alam MK. Ameloblastic fibrosarcoma - a rarity? *JPRAS Open*. 2019; 21: 56-62.
13. Onda T, Yamazaki A, Hayashi K, Iwasaki T, Hashimoto K, Takano M. Ameloblastic fibroma in mandibular anterior tooth region: a case report. *Bull Tokyo Dent Coll*. 2021; 62 (1): 49-54.
14. Agaimy A, Skalova A, Franchi A, Alshagroud R, Gill AJ, Stoeher R et al. Ameloblastic fibrosarcoma: clinicopathological and molecular analysis of seven cases highlighting frequent BRAF and occasional NRAS mutations. *Histopathology*. 2020; 76 (6): 814-821.

Correspondencia/Correspondence:  
**Cynthia Marina Urias Barreras**  
 E-mail: cynthia.urias@uas.edu.mx